

Title	先天性骨盤内動静脈奇形の2例
Author(s)	眞鍋, 由美; 植垣, 正幸; 浅妻, 顕; 青山, 輝義; 橋村, 孝幸
Citation	泌尿器科紀要 (2011), 57(1): 25-28
Issue Date	2011-01
URL	http://hdl.handle.net/2433/135438
Right	許諾条件により本文は2012-02-01に公開
Type	Departmental Bulletin Paper
Textversion	publisher

先天性骨盤内動静脈奇形の 2 例

眞鍋 由美¹, 植垣 正幸¹, 浅妻 顕²,
青山 輝義¹, 橋村 孝幸¹

¹関西電力病院泌尿器科, ²高山クリニック

TWO CASES OF CONGENITAL PELVIC ARTERIOVENOUS MALFORMATION IN MALE

Yumi MANABE¹, Masayuki UEGAKI¹, Akira ASAZUMA²,
Teruyoshi AOYAMA¹ and Takayuki HASHIMURA¹

¹The Department of Urology, Kansai Electric Power Hospital

²The Department of Urology, Takayama Clinic

Congenital pelvic arteriovenous malformation(AVM) is extremely rare, especially in males. Herein we report two males with pelvic AVM. Computed tomography (CT) or magnetic resonance imaging (MRI) demonstrated markedly dilated, and tortuous vessels in the pelvis in both patients. The first patient, a 77-year-old male, presented with difficulty in voiding and weak urinary stream. He was scheduled to have a prostate biopsy for suspicion of prostate cancer with pelvic lymph node swelling. However, the mass was diagnosed as pelvic AVM with MRI, and the prostate biopsy was cancelled. He has been followed conservatively since then. The second patient, a 55-year-old male, presented with gross hematuria which caused severe hemorrhagic hypovolemic shock. He had pelvic AVM, and he was treated with transcatheter arterial embolization two times. When patients with this disease present with general urological symptoms, urological procedures, without attention to this disease, might cause severe complications such as serious hemorrhage. We discuss the clinical course and the treatment for AVM, and review the literature.

(Hinyokika Kiyo 57 : 25-28, 2011)

Key words : Pelvic AVM, Congenital

緒 言

動静脈瘻は、全身のあらゆる部位に発生しえるが、好発部位は主に四肢や肺、頭頸部などである。手術や外傷などの既往のないものは先天性動静脈奇形と考えられるが、男性の先天性骨盤内動静脈奇形は非常に稀な疾患である。今回、他疾患および排尿障害の精査中に男性の先天性骨盤内動静脈奇形と考えられる 2 例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者 1 : 77歳, 男性

主訴 : 排尿困難, 尿勢低下

既往歴 : 高血圧

家族歴 : 特記事項なし

現病歴 : 2007年12月, 排尿障害の精査中, 他院にて撮影した腹部 CT で右内腸骨リンパ節腫大を指摘され, 前立腺癌リンパ節転移の疑いで紹介受診となった。

入院時現症 : 身長 164 cm, 体重 60 kg, 直腸診にて明らかな硬結を認めなかった。

入院時検査所見 : 血液生化学, 尿所見ともに異常を

認めなかった。PSA 2.76 ng/ml。

画像所見 : 超音波検査では前立腺推定重量は 65 g で内部に明らかな低エコー領域を認めず, 膀胱内にも明らかな腫瘍を認めなかった。他院で施行した腹部単純 CT では右内腸骨領域のリンパ節腫大を疑う等吸収の腫瘍を認めた (Fig. 1)。しかし, 造影 CT ではこの腫瘍は早期に造影効果を認めた。MRI では T1, T2 強調画像ともに, 同部位は拡張した血管と思われる低信号域を認め, 強く造影されることより拡張した血管



Fig. 1. CT scan shows the dilated and tortuous vessels on the right side of the pelvis.

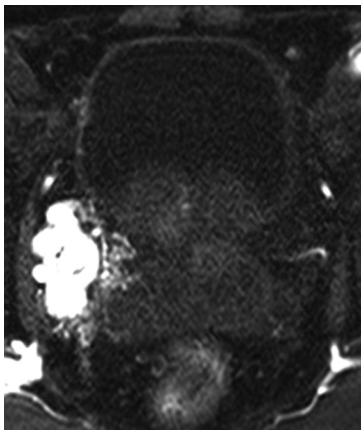


Fig. 2. Coronal T2-weighted MRI imaging shows the low intensity area that considered as the dilated vessel. Contrast MRI imaging shows the strongly enhanced dilated vessels.

の蛇行と考えられた (Fig. 2)。前立腺には明らかな前立腺癌を疑う所見は認めず、以上より動静脈奇形と診断した。

入院後経過：PSA が比較的低値ではあるものの、他院 CT の所見より前立腺癌を含む悪性疾患のリンパ節転移を考え前立腺生検を検討していた。しかしリンパ節と思われた部位は、MRI の所見より骨盤内動静脈奇形が強く疑われた。前立腺生検を施行することにより大出血を来す危険が考えられたため生検を中止した。

患者 2：54歳、男性

主訴：肉眼的血尿

既往歴：糖尿病、慢性腎不全（維持透析中）、心ペースメーカー留置中。

家族歴：特記事項なし

現病歴：2007年2月、肉眼的血尿が出現、他院にて尿道カテーテルを留置されるが血尿が増強したため当院を受診した。

入院時現症：血圧 154/69 mmHg、脈拍80回/分。尿道カテーテルより鮮紅色の血尿を認めた。膀胱洗浄を行うと多量の凝血塊を排出し、膀胱または前立腺からの出血が疑われた。

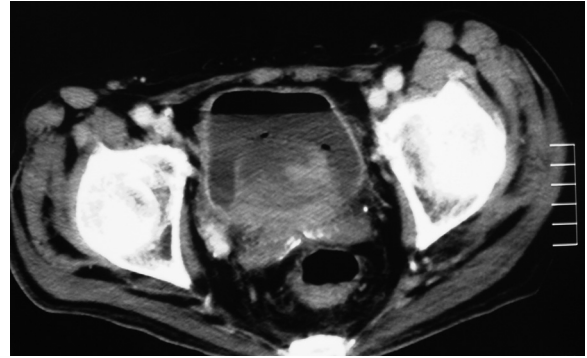


Fig. 3. CT scan shows the tortuous vessel in the right side of the pelvis.



Fig. 4. Angiography shows the dilated vessel, and the feeding artery was right internal iliac artery.

入院時検査所見：末梢血検査；RBC $334 \times 10^4/\mu\text{l}$, Hb 10.2 g/dl, Hct 30.9%. 血液生化学検査：Cre 4.72 mg/dl, BUN 45.7 mg/dl, K 3.4 mEq/l, CRP 0.24 mg/dl.

画像所見：入院直後より尿道カテーテルからの血尿が増強し、血圧低下も認めた。腹部造影 CT では膀胱の右側に拡張、蛇行する血管を認め動静脈奇形が疑われた (Fig. 3)。引き続き施行した血管造影にて右内腸骨動脈から栄養される拡張した異常血管と流出静脈を認め、動静脈奇形と診断した。

入院後経過：持続する血尿はコントロールが困難であり、輸血を施行しながら動脈塞栓術（以下 TAE と略す）を施行した (Fig. 4)。TAE にはスポンゼールとリピオドールを用いた。TAE 後、続いて経尿道的膀胱内血腫除去術を施行した。膀胱内は、膀胱壁全体に拡張した血管が発達しており、尿道にも発赤した粘膜を多数認めた。血腫を除去し、可及的に止血を行い手術を終了した。しかし術後より再び肉眼的血尿が出現した。膀胱タンポナーデを来したために、まず経尿道的に血腫を除去し再び止血を試みた。しかし止血は困難であり、再度血管造影を行った。血管造影 (Fig. 5) では右内腸骨動脈以外にも、右下腹壁動脈、右上腎動



Fig. 5. Some other feeding arteries also flew into the nidus.



Fig. 6. All of the feeding arteries were embolized.

脈、左内腸骨動脈からも拡張する流入血管がみられ、これらすべてに対して塞栓術を施行し、止血をしえた (Fig. 6).

考 察

動静脈奇形 (arteriovenous malformation) は、通常存在する毛細血管の介在なしに流入血管および流出血管といわれる動静脈の交通により形成される先天性の血管異常である。

一方、手術や外傷などにより後天的にこのような血管異常が生じたものは動静脈瘻 (arteriovenous fistula) と言われ、前者と区別される¹⁾。女性では分娩や妊娠、骨盤内手術後の動静脈瘻が報告されているが、男性では稀な疾患で、骨盤内手術や外傷の既往がなければ先天性動静脈奇形と考えられる。

三股らの報告によると発症年齢は27歳から68歳と比較的高い³⁾。長年にわたり無症状であることが多く、下腹部や陰部の違和感などで特徴的な症状がないため本疾患を疑われずに経過観察となることが多い^{1-3,5,9)}。発見された時点で明らかな外傷や手術歴がなければ先天性と診断されるため中高年で発症する例が多いと考えられる。

症状としては、無症状なもの他、血尿、下腹部、会陰部、臀部の違和感や痛み、排尿困難などが主なものであるが特徴的なものではなく、稀に高心拍出量性心不全、血精液症、下肢腫脹などがみられることがある²⁻⁷⁾。また、身体所見では下腹部の診察や直腸診で拍動性腫瘤を触知することがある²⁻⁷⁾。血管雑音を聴取する例もあるとされるが¹⁻⁴⁾、本症例では血管雑音の聴取はしなかった。本症例では、患者1では排尿障害を主訴とし、著明な前立腺肥大症を合併しておりその精査中に偶然発見された。前立腺肥大症に対する経尿道的前立腺切除術により止血困難な出血を来した症例に、骨盤内動静脈奇形が認められたという報告がある^{8,9)}。このように当該患者を予期せず泌尿器科検査や治療を行った場合、予想外の出血を来す危険が考えられる。患者1では、CTで骨盤内動静脈奇形を前立腺癌リンパ節転移と判断し、当初は前立腺生検を予定していた。もし施行していれば重篤な事態を来した可能性が考えられた。

診断は造影CT、造影MRである程度可能であり、超音波カラードップラーでの血管構造の描出が有用であるという報告⁴⁾もみられる。周囲臓器との関係や流入動脈、流出静脈および側副血行路などの詳細の把握には血管造影が最も有用であると考えられる²⁻⁹⁾。しかし特徴的な症状を認めないため、排尿障害や血尿など一般的な主訴で受診した患者でも、侵襲的介入をする場合は本疾患を念頭においた画像スクリーニングを行うべきであると考えられる。

治療は、従来は流入動脈の結紮や病巣の切除などの外科的治療が行われていたが、奏功しない例や再発例が多く、現在では動脈塞栓術 (TAE) を選択している報告が多い³⁻⁹⁾。術前に完全に切除可能と判断した場合でも、術前に TAE が奏功すれば治療が完了すること、TAE 後に手術が必要な場合にも術中出血量を減少させることが可能であること、また TAE は繰り返し施行することが可能であるため、TAE が第一選択となりえる^{5,6,8,9)}。今回、患者2に対しては大量出血による貧血の進行、血圧低下などの全身状態の悪化を認め、骨盤内動静脈奇形と診断後直ちに TAE を施行したがその後も再出血を認めた。再度血管造影を行うと、多数の血管からの流入血管を認めたため、それらすべてに対して塞栓術を施行し止血しえた。このように1回の TAE では不十分であることも多いが、繰り返し行うことで TAE により止血を得ることが多い。一方、無症状で増大傾向のないものに関しては経過観察が可能であるが、定期的な超音波やCTでの評価が必要であるとされる^{2,9)}。Calligaro らは先天性動静脈奇形全体では約20%が無症状であったと報告している²⁾。患者1では排尿障害については前立腺肥大症によるものと判断し、骨盤内動静脈奇形に関しては無症

状のため現在経過観察中である。

結 語

男性の先天性骨盤内動静脈奇形と考えられる2例を経験した。治療としてはTAEが有効であった。一般的な症状で受診した患者にも、侵襲的な泌尿器科的処置にあたっては本疾患を念頭においたスクリーニングが必要であると考えられ、また原因不明の骨盤部、会陰部の症状や肉眼的血尿などをみた際には本疾患を鑑別に入れる必要が考えられた。

文 献

- 1) Trout III HH, McAllister Jr HA, Giordano JM, et al.: Vascular malformations. *Surgery* **97**: 36-41, 1985
- 2) Calligaro HD, Sedlacek TV, Saverese RP, et al.: Congenital pelvic arteriovenous malformations: long-term follow-up in two cases and review of the literature. *J Vasc Surg* **16**: 100-108, 1992
- 3) 三股浩光, 谷川龍彦, 今川全晴, ほか: 男性先天性骨盤内動静脈瘻の1例. *日泌尿会誌* **83**: 243-246, 1992
- 4) Tanaka M, Iida K, Matsumoto S, et al.: A case of pelvic arteriovenous malformation in a male. *Int J Urol* **6**: 374-376, 1999
- 5) Jacobowitz GR, Rosen RJ, Rockman CB, et al.: Transcatheter embolization of complex pelvic vascular malformations: results and long-term follow-up. *J Vasc Surg* **33**: 51-55, 2001
- 6) Suzuki K, Nishimi D, Morioka H, et al.: Hematospermia associated with congenital arteriovenous malformation of internal iliac vessels. *Int J Urol* **14**: 370-372, 2007
- 7) Chikamatsu E, Nagashima T, Mizukami Y, et al.: Pelvic arteriovenous malformation with iliac vein thrombosis: a case report. *J Cardiovasc Surg* **42**: 115-118, 2001
- 8) Touyama H, Hatano T and Ogawa Y: Massive prostatic bleeding after transurethral resection of the prostate in a patient with a congenital pelvic arteriovenous malformation. *J Urol* **160**: 1803, 1998
- 9) 鬼塚千衣, 新村研二: 経尿道的前立腺切除術施行中に判明した骨盤内動静脈奇形の1例. *西日泌尿* **69**: 321-323, 2007

(Received on June 7, 2010)
(Accepted on September 27, 2010)